

Title	副腎神経節細胞腫の1例
Author(s)	吉田, 栄宏; 斎藤, 純; 高尾, 徹也; 市丸, 直嗣; 高羽, 夏樹; 野々村, 祝夫; 奥山, 明彦; 辻本, 裕一; 青笹, 克之; 近藤, 雅彦
Citation	泌尿器科紀要 (2005), 51(2): 93-96
Issue Date	2005-02
URL	http://hdl.handle.net/2433/113554
Right	
Type	Departmental Bulletin Paper
Textversion	publisher

副腎神経節細胞腫の1例

吉田 栄宏¹, 斎藤 純¹, 高尾 徹也¹, 市丸 直嗣¹
 高羽 夏樹¹, 野々村祝夫¹, 奥山 明彦¹, 辻本 裕一²
 青笹 克之², 近藤 雅彦³

¹大阪大学大学院医学系研究科器官制御外科学 (泌尿器科),

²大阪大学大学院医学系研究科病理病態学, ³近藤クリニック

ADRENAL GANGLIONEUROMA: A CASE REPORT

Takahiro YOSHIDA¹, Jyun SAITO¹, Tetsuya TAKAO¹, Naotsugu ICHIMARU¹,
 Natsuki TAKAHA¹, Norio NONOMURA¹, Akihiko OKUYAMA¹, Yuichi TSUJIMOTO²,
 Katsuyuki AOZASA² and Masahiko KONDO³

¹The Department of Urology, Osaka University Graduate School of Medicine

²The Department of Pathology, Osaka University Graduate School of Medicine

³The Kondo Clinic

A patient with an incidentally diagnosed adrenal ganglioneuroma is reported. A 37-year-old man who underwent abdominal computed tomography (CT) in the course of evaluating liver dysfunction was found to have a right adrenal tumor. Laboratory data including results of endocrinologic tests were normal except for a slight elevation of plasma aldosterone. With a preoperative diagnosis of non-functioning right adrenal tumor, resection was performed. The tumor specimen was noncystic weighing 150 g and measuring 10×8×3 cm. The histopathologic diagnosis was ganglioneuroma originating from the adrenal gland. Adrenal ganglioneuroma is relatively rare, 147 cases including ours have been reported in Japan. Increasing numbers of these tumors are being found incidentally by ultrasonography or CT. Ganglioneuroma is a benign tumor, and disagreement exists concerning diagnosis and indications for surgery.

(Hinyokika Kyo 51: 93-96, 2005)

Key words: Ganglioneuroma, Adrenal

結 言

神経節細胞腫は交感神経系に発生する良性腫瘍である。近年画像診断の進歩により偶然発見される機会が増えその報告例は増加している。しかし特徴的画像所見に乏しく術前診断は困難なことも多い。

今回われわれは副腎神経節細胞腫の一例を経験したので若干の文献的考察を加えてこれを報告する。

症 例

患者: 37歳, 男性

主訴: 右副腎腫瘍精査

既往歴・家族歴: 特記すべきことなし

現病歴: 2003年5月, 健診にて肝機能異常を指摘されたため近医を受診し, 施行された腹部CTにて右副腎腫瘍を疑われた。精査加療目的で当科紹介となり, 入院となった。

入院時現症: 身長 172 cm, 体重 62 kg, 血圧 124/74 mmHg, 腹部所見では特に異常を認めなかった。

検査所見: 末梢血検査では WBC 5,270/mm³,

RBC 550×10⁴/mm³, Hb 15.3 g/dl, Ht 44.7%, Plt 22.5×10⁴/mm³, 血液生化学検査では Na 145 mEq/l, K 4.0 mEq/l, Cl 109 mEq/l, BUN 13 mg/dl, Cr 1.1 mg/dl, AST 14 IU/l, ALT 22 IU/l, γ -GTP 16 IU/l, ALP 124 IU/l, LDH 183 IU/l, CHE 3,892 U/l, TP 6.9 g/dl, T-Chol 157 mg/dl, TG 147 mg/dl, CRP <0.2 mg/dl, 尿検査では pH 5.5, 糖 (-), 蛋白 (-), RBC (-), WBC (-) と特に異常を認めなかった。内分泌学的検査ではコルチゾール 13.1 μ g/dl, ACTH 39 pg/ml, アルドステロン 13.5 ng/dl (2-13) と, アルドステロンが若干の高値を認めた他に異常は認めなかった。

画像診断: 腹部単純CTでは右副腎の部位に 6.7×5.7 cm の境界明瞭な分葉状腫瘍を認めた。内部には粗大な点状の石灰化を含んでいた。一部にわずかな隔壁もしくは充実部と考えられる成分を含んでおり, 造影CT (Fig. 1) でこの部にはわずかに造影効果を認めた。腹部MRIでは右副腎の部位に 6.0×6.0 cm の分葉状腫瘍を認めた。T1強調像 (Fig. 2) では内部は均一な低信号を示し, 造影早期には隔壁様の濃染を

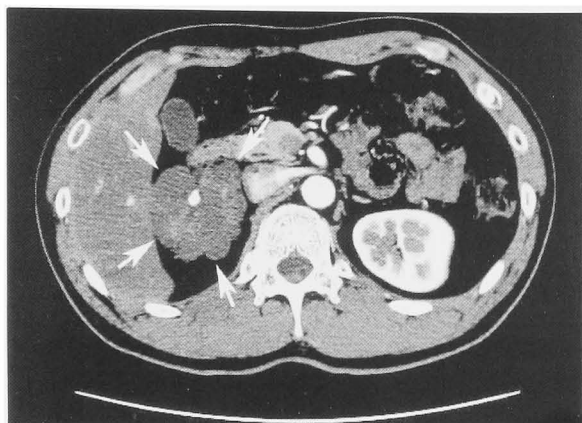


Fig. 1. Abdominal enhanced CT shows the segmental area which is slightly enhanced.

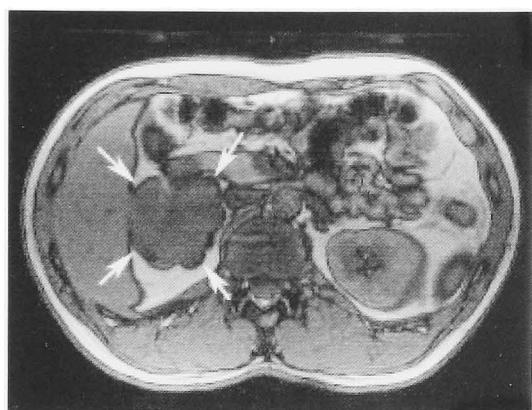


Fig. 2. MRI shows low-intensity on T1-weighted image, but middle intensity on T2-weighted image.

示し、時間と共に濃染範囲は拡大した。また T2 強調像では中信号から高信号を示し、内部は隔壁様に低信号で境界されていた。腫瘍は右側から頭側にかけて肝右葉と、腹側で十二指腸下行部と、背側で下大静脈と接するが明らかな浸潤を認めなかった。以上より、神経原性腫瘍、血管腫、リンパ管腫、線維腫などが考えられたが、確定診断は困難であった。

入院後経過、手術所見：内分泌非活性型右副腎腫瘍と診断し、経腹膜的に腫瘍摘出術を施行した。画像診断上、周囲臓器への明らかな浸潤は認めなかったものの、癒着・浸潤による術操作の困難も予想されたため、体腔鏡手術ではなく開放手術による摘出法を選択した。腫瘍は肝下面、下大静脈、胆嚢と接していたが容易に剝離できた。正常にみえる右副腎と連続した腫瘍を一塊として摘出した。

摘出標本：表面平滑で偽被膜に包まれていた。剖面は白色調を呈し、150 g、10×8×3 cm 大の充実性腫瘍であった (Fig. 3)。

病理組織学的所見：波状線維束が錯綜している病変が主体であった。異型は乏しく、周囲との境界は比較的明瞭であった。腫瘍は副腎組織と融合して、腫

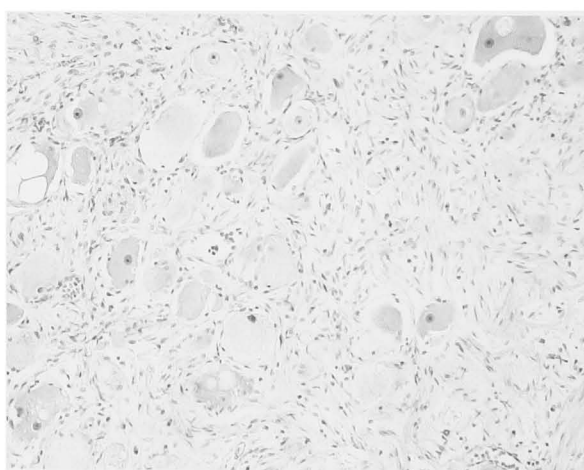


Fig. 3. Macroscopic view of the tumor shows a white homogenous mass.

瘍本体内にも副腎様組織が見られた。また Schwann 細胞および神経線維が主体で部分的によく分化した ganglion cell が混在している像が見られた (Fig. 4)。病理学的に副腎と腫瘍の移行部を認めた場合、副腎原



A



B

Fig. 4. Microscopic view of the tumor shows mature ganglion cells (A: ×100, HE staining) with Schwann cells and neurofibrosis bands (B: ×100, HE staining) in adrenal gland.

発とされることが多いことから、本症例を副腎原発の神経節細胞腫と診断した。術後特に問題なく、手術後26日目に退院となった。術後6カ月の時点で再発なく経過している。

考 察

神経節細胞腫は、神経堤由来の交感神経芽細胞系腫瘍に属し、交感神経節に発生する。交感神経系の腫瘍はその分化度により神経芽細胞腫、神経節芽細胞腫、神経節細胞腫に分類されている。このうち最も悪性なのが神経芽細胞腫であり、神経節細胞腫は良性腫瘍とされている。また、各組織間には互いに移行型があり、神経芽細胞腫から神経節芽細胞腫を経て神経節細胞腫に成熟分化するとされている。

発生部位は、Tertzakian ら¹⁾によると頸部交感神経節、腹腰部交感神経節、副腎髄質が各々 1/3 ずつとされ、大山ら²⁾によると縦隔に9%、後腹膜腔に28%、中枢神経に17%、副腎に36%と報告されている。

本症は臨床的に特徴的症狀に乏しい。主訴は偶発腫瘍が最も多く、腹痛、下痢、血尿の順となっている。また本症は一般に内分泌学的に非活性であり、臨床的に内分泌学的症狀を呈さないことが多い疾患である。しかし10%程度にカテコールアミンまたはその代謝産物の異常を伴うとされている³⁾。画像診断上、超音波検査にて低エコー、CT 検査にて境界明瞭で軽度造影効果を呈する。時に石灰化を伴う。MRI 検査では、T1 強調画像にて低信号、T2 強調画像にて高信号を示し、Gd-DTPA を使用した dynamic scan では造影効果の遅延が認められる⁴⁾。画像診断上これらの特徴があるとされているが、確定的なものではない。術前に確定診断をえることが困難なことも多いが、術前に経皮的針生検により診断しえた報告例^{5,6)}もある。針生検の問題点としては、微小検体にもとづく病理診断の困難さ⁷⁾、褐色細胞腫であった場合には高血圧の誘発、悪性腫瘍であった場合には播種などが挙げられる。

治療は手術による摘出が一般的である。神経節細胞腫は良性腫瘍であるが、悪性化した報告⁸⁾や、巨大発育した報告^{9,10)}、肝臓・下大静脈に浸潤し摘出不可能であった報告¹¹⁾もあり、手術による腫瘍摘除が必要であると考えられる。

副腎偶発腫瘍のうち神経節細胞腫の占める割合は、Aso ら¹²⁾によると210例の内11例、5.2%であった。副腎偶発腫瘍に対する治療方針として、座光寺ら¹³⁾は内分泌活性型腫瘍、画像上悪性所見が疑われる場合、副腎出血を伴うもの、腫瘍径 5 cm 以上または増大傾向のあるものを手術適応とし、それ以外の腫瘍は3～6カ月ごとの経過観察を行う、としている。また

Table 1. Characteristics of 147 adrenal ganglioneuroma cases reported in Japan

年齢	1-75歳 (平均 39.1歳)
性別	男性 84例 (57.1%), 女性 63例 (42.8%)
主訴	偶発腫瘍 49例 (33.3%), 腹痛 30例 (20.4%), 下痢 8例 (5.4%), 血尿 6例 (4.1%), その他 24例 (16.3%), 記載なし 30例 (20.4%)
発生部位	右 84例 (57.1%), 左 54例 (36.7%), 両側 1例 (0.7%), 記載なし 8例 (5.4%)
腫瘍径	2-23 cm (平均 7.6 cm)
重量	11-5,050 g (平均 265.3 g)

副腎腫瘍に対しては低侵襲である体腔鏡下副腎摘除術が一般的になってきている。体腔鏡下手術の適応も諸家により様々であるが、瀬口ら¹⁴⁾は腫瘍径 5 cm 以下を1つの基準として挙げており、その理由として 5 cm を超えると悪性腫瘍の可能性が高くなり、良性腫瘍でも周囲との癒着や副腎動静脈が太くなり手術操作が困難となるとしている。しかし、最近では腫瘍径にかかわらず体腔鏡下手術を施行する施設が増えている。本症例では術前の画像診断上、腫瘍と下大静脈との癒着により手術操作が困難となる可能性があったため、体腔鏡手術ではなく開放手術を選択した。

副腎神経節細胞腫の本邦報告例は、妻谷ら¹⁵⁾に続き、岩本ら¹⁶⁾が60例を集計している。われわれはそれらに加え、自験例を含め検索しえた限り計147例を集計した (Table 1)。年齢は1歳より75歳までで、21～40歳が最多である。性別では男性84例、女性63例とやや男性に多い。主訴は偶発腫瘍が49例と最も多く、以下腹痛30例、下痢8例、血尿6例の順となっている。発生部位は右84例、左54例と右の方がやや多い。腫瘍径は 2～23 cm で平均 7.6 cm、重量は 11～5,050 g で平均 265.3 g である。近年は画像診断の進歩と普及により健診などで副腎偶発腫瘍として小さな腫瘍径で発見される傾向にあり、1980年以降、本邦では急激に増加している。本症例も健診にて発見された副腎偶発腫瘍であった。本疾患は手術により摘除可能であり予後も良好であるが、術前診断は困難であることも多い。良性腫瘍であるため、術前診断手法と手術適応・手術方法について今後のさらなる検討が必要であると考えられた。

以上、副腎神経節細胞腫の1例を経験したので、若干の文献的考察を加え報告した。

結 語

副腎神経節細胞腫の1例を若干の文献的考察を付けて報告した。

本論文の要旨は、第185回日本泌尿器科学会関西地方会において報告した。

文 献

- 1) Tertzakian GM and Herr HW: Ganglioneuroma arising in accessory adrenal gland. *Urology* **15**: 401-404, 1981
- 2) 大山伸幸, 池田秀夫, 清水保夫, ほか: 後腹膜神経節細胞腫の1例. *泌尿紀要* **42**: 663-665, 1996
- 3) 原 芳紀, 神座慎一郎, 松浦謙一: 副腎神経節細胞腫の1例. *西日泌尿* **63**: 369-371, 2001
- 4) 吉川哲夫, 山中弥太郎, 斎藤忠則, ほか: 副腎神経節細胞腫の1例. *泌尿器外科* **7**: 403-405, 1994
- 5) 本多正人, 矢澤浩治, 西村健作, ほか: 後腹膜腔鏡下に摘出した副腎神経節細胞腫の1例. *西日泌尿* **59**: 853-855, 1997
- 6) 今出陽一郎, 大嶺卓司: 経皮的針生検により診断しえた副腎神経節細胞腫 (ganglioneuroma) の1例. *泌尿器外科* **11**: 1019-1023, 1998
- 7) 畠 亮, 矢内原 仁, 早川邦弘, ほか: 副腎偶発腫瘍26例の臨床的研究 手術適応に関する一考察. *日泌尿会誌* **85**: 974-980, 1994
- 8) Ricci A, Callihan T, Parham DM, et al.: Malignant peripheral nerve sheath tumors arising from ganglioneuromas. *Am J Surg Pathol* **18**: 19-29, 1984
- 9) 駒井好信, 小林 剛, 奥野哲男, ほか: 副腎原発巨大神経節細胞腫の1例. *泌尿器外科* **15**: 719, 2002
- 10) 岩瀬克己, 川瀬恭平, 宮川秀一, ほか: 巨大な無症候性右副腎髄質原発神経節神経腫の1例. *日臨外会誌* **53**増: 183, 1992
- 11) 八木慎次, 和田誠基, 北濱真司, ほか: 肝臓, 下大静脈に浸潤した右副腎原発 ganglioneuroma の1例. *日内分泌会誌* **78**: 122, 2002
- 12) Aso Y and Homma Y: A survey on incidental adrenal tumors in Japan. *J Urol* **147**: 1478-1481, 1992
- 13) 座光寺秀典, 荒木勇雄, 古谷泰久, ほか: 副腎腫瘍の治療指針. *臨泌* **57**: 581-584, 2003
- 14) 瀬口博史, 内藤誠二: 副腎腫瘍の治療指針. *臨泌* **57**: 586-593, 2003
- 15) 妻谷憲一, 林 美樹, 田畑尚一, ほか: 副腎神経節細胞腫の1例. *泌尿紀要* **35**: 1897-1901, 1989
- 16) 岩本勇作, 上田陽彦, 鈴木俊明, ほか: 副腎神経節細胞腫 (ganglioneuroma) の1例. *泌尿紀要* **40**: 499-503, 1994

(Received on June 18, 2004)
(Accepted on September 2, 2004)